

■ 症例報告 ■

3か月男児の異型大動脈縮窄に対するステント留置 —ミディアムサイズステントにおけるステントリマウント手技の効果—

長岡 孝太, 藤井 隆成, 氏家 岳人, 清水 武, 大山 伸雄, 喜瀬 広亮, 富田 英

Stent implantation for atypical coarctation of the aorta in a 3 months old infant: Remount procedure of a medium size stent for downsizing of delivery profile

Kota Nagaoka, Takanari Fujii, Gakuto Ujiie, Takeshi Shimizu, Nobuo Oyama, Hiroaki Kise, and Hideshi Tomita

doi: 10.20599/jcic.5.14

■ 要 約 ■ 大動脈縮窄に対するステント留置は、一般に成人の血管径まで拡大できるステントを留置できる場合に高い推奨レベルとなっており、ガイドライン上も対象の体重25kg以上が推奨されている。乳幼児期の未治療の大動脈縮窄では外科手術が第一選択であるが、手術侵襲や長期予後への懸念から、止むを得ず姑息的治療としてステント留置が考慮される場合がある。乳児に施行する場合、体格に比して大きなシースを大腿動脈に留置する必要があることから、穿刺血管損傷も大きな問題となる。国内で流通しているラージまたはエクストララージサイズのステントはバルーンにマウントされておらず、適切なサイズのバルーンにマウントして使用する。一方、バルーンにマウントされたミディアムサイズのステントを別のバルーンにリマウントする手技については報告が少ない。今回、われわれは3か月男児の異型大動脈縮窄に対して、Omnalink Elite® 10mm/29mmをムスタング™ 5mm/40mmにリマウントすることで6Fシースの通過を可能とし、ステント留置術を安全に施行し得た症例を経験した。

■ Abstract ■ Stent placement is indicated for coarctation of the aorta in older children when the implanting stent is capable to dilate the vessel to an adult vessel diameter. In such a case, desirable body weight is over 25kg, and a large or an extra-large stent is generally indicated. Although surgical repair remains the “gold standard” therapeutic option for native coarctation in infants and small children, stent implantation can be considered in patients with concern on the high surgical risk and on long-term prognosis. Femoral arterial injury is an important issue in stenting for coarctation of the aorta. A currently available large or extra-large stent is used mounting on an appropriate balloon, while remounting procedure of a pre-mounted small or medium sized stent has not been established. We report stenting for atypical coarctation of the aorta in a 3 months old infant using Omnalink Elite® 10mm/29mm remounted on Mustang™ 5mm/40mm, which made it possible to introduce in a downsized delivery system of 6F.

■ Key words ■ coarctation of the aorta, stent, remount procedure, sheath, infant

はじめに

大動脈縮窄に対するステント留置は、一般に成人の血管径まで拡大できるステントを留置できる場合に高い推奨レベルとなっている。このためラージもしくはエクストララージサイズのステントの留置が想定されており、ガイドライン上も体重25kg以上が求められている。近年、先天性心疾患に対してもミディアムサイズのステントを用いた治療が報告されているが¹⁾、大動脈縮窄に用いられる症例

は限定的である。乳幼児期の未治療の大動脈縮窄では外科手術が第一選択であるが、手術侵襲や血管炎による狭窄の場合などで術後の長期予後に懸念がある場合、姑息的なステント留置が考慮される。わが国で入手できるラージまたはエクストララージサイズのステントは適切なサイズのバルーンにマウントして留置するが、プレマウントのミディアムサイズのステントのリマウント手技については報告が少ない。

昭和大学病院小児循環器・成人先天性心疾患センター

Pediatric Heart Disease and Adult Congenital Heart Disease Center, Showa University Hospital, Tokyo, Japan

Received July 9, 2020; Accepted August 24, 2020

症 例

症例は3か月男児，身長65.2cm，体重7580g，在胎37週1日，体重3052gで出生し，予防接種の際に心雑音を指摘され当院に紹介となった。血圧は右上肢で168/104mmHg，左上肢で106/65mmHg，下肢で83/48mmHg，心拍数125回/分，呼吸数32回/分，経皮酸素飽和度100%（室内気），右頸部でスリルを触知し，胸骨右縁第2肋間でLevine 3度の収縮期駆出性雑音を聴取し，背部でも収縮期雑音を聴取した。胸部エックス線では心胸郭比60%と心陰影は拡大し，心電図ではII, III, aVF誘導で陰性T波を認めた。心臓超音波検査では心室中隔厚6.7mm，左室後壁厚7.1mmと心筋の肥厚を認め，左室駆出率は46%，左室拡張末期径



Fig. 1 3-dimensional CT angiography demonstrating severe stenosis of distal thoracic aorta, severe stenosis of left common carotid artery, and obstruction of left subclavian artery

は31.1mm（129% of normal）であった。血液検査では炎症反応や血管炎のマーカーは陰性であり，BNPは382.4pg/mLと高値を示した。造影CT（Fig. 1）では胸部下行大動脈の高度狭窄に加えて左総頸動脈の高度狭窄および左鎖骨下動脈の完全閉塞を認め，異型大動脈縮窄と診断した。狭窄の形態から，大動脈炎症候群や線維筋性異形成などの基礎疾患を検索するため，心臓カテーテル検査および血管内超音波検査（intravascular ultrasound, 以下IVUS）を施行し，適応があればステント留置を行う方針とした。

大動脈縮窄に対するステント留置は施設の倫理委員会の承認を得て行い，ステントのリマウントを含むすべてのカテーテル手技は，患者家族に十分な説明を行い文書での同意を得た。

全身麻酔下で右大腿動脈に4Fシースを留置したのち，ヘパリン100単位/kgを静注して心臓カテーテル検査を開始した。上行大動脈160/60(100) mmHg，大腿動脈55/50(53) mmHg，下行大動脈縮窄部での圧較差は105mmHgであった。血管造影では左総頸動脈の高度狭窄および左鎖骨下動脈の完全閉塞をCTと同様に認め，腹部血管や腎動脈，近位の四肢動脈の狭窄は認めなかった。胸部下行大動脈縮窄部の近位部参照血管径は5.5mm，最狭窄部径は1.3mm，遠位部参照血管径は5.2mm，狭窄部の長さは21.0mmであった（Fig. 2a）。IVUSでは縮窄部の最小径は1.5mmで，血管壁に高輝度の肥厚を認めた（Fig. 3）。これらの所見は，高安動脈炎や線維筋性異形成による二次性の大動脈縮窄のそれに類似しており²⁾，外科手術はリスクが高く，バルーン血管形成術は効果が乏しいと予測された。体格からラージおよびエクストララージサイズのステントは選択し難かったが，12mm程度まで拡大できるミディアムサイズのステントが留置できれば，段階

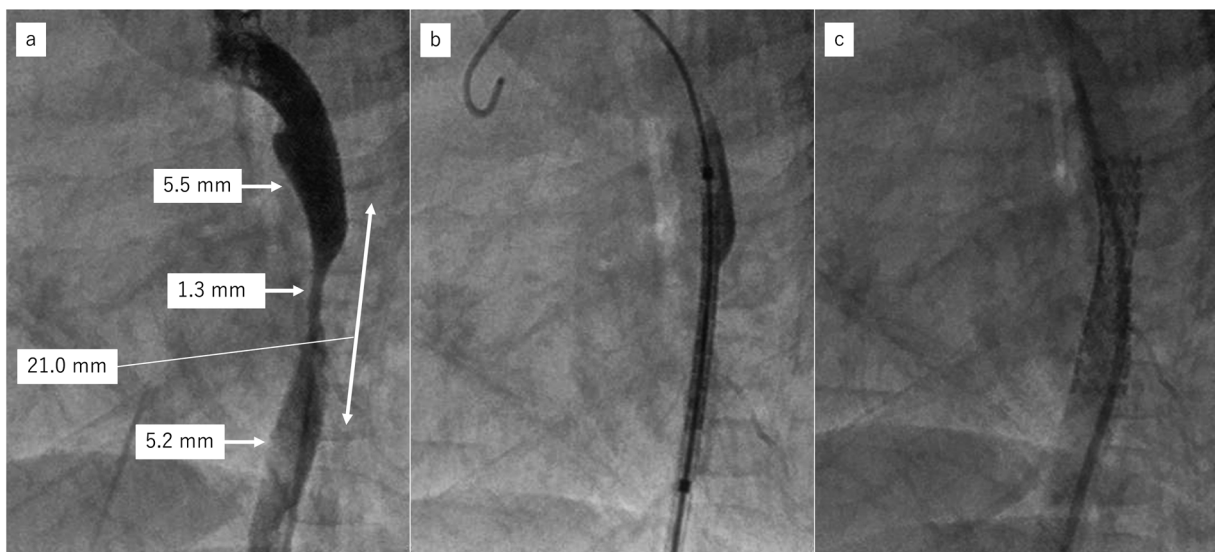


Fig. 2 Stenting for atypical coarctation of the aorta. (a) Angiogram before the procedure shows long stenosis of distal thoracic aorta. The narrowest diameter was 1.3 mm. (b) Angiogram at the point of stent positioning. (c) Angiogram after the procedure.

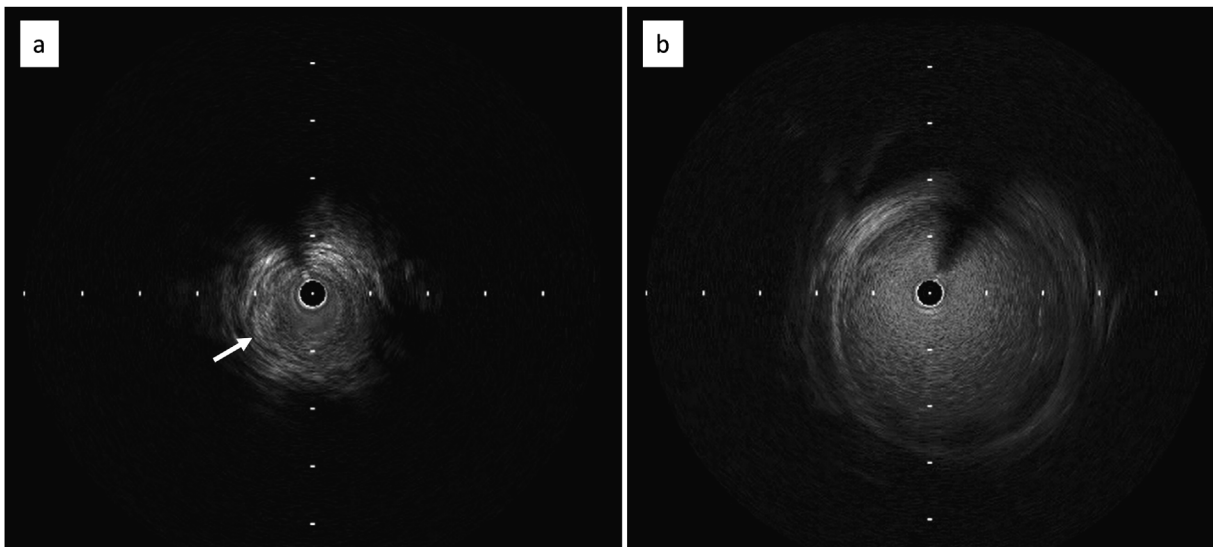


Fig. 3 (a) Intravascular ultrasound image at the coarctation site shows high echoic wall thickness (white arrow). (b) Intravascular ultrasound image in the abdominal aorta.

的なステント再拡張により学童期までは外科的再介入を回避しようと考え、ステント留置を行う方針とした。狭窄部の形態と参照血管径から初回の拡大は5mm程度が妥当と考えられたが、今後の成長にあわせてなるべく大きな径まで再拡張が行えるステント選択が望ましいこと、穿刺血管損傷を避けるために可能な限りシースをサイズダウンする必要があることから、ステントのリマウントを試みることにした。以上の条件からステントはOmnalink Elite® 10mm/29mm (Abbott; Chicago, IL) を選択し、最小適合シース径が7Fであるこのステントを5mm径のバルーンへリマウントすることで、シースをサイズダウンできるか確認した。まずシステムバルーンをわずかに拡張してステントをシステムから外し、スターリング™ 5mm/40mm (Boston Scientific; Marlborough, MA, 最小適合シース径4F) にリマウントして5Fシースの通過を確認したところ、ステントとバルーンの圧着が弱く脱落した。次に同ステントをムスタング™ 5mm/40mm (Boston Scientific; Marlborough, MA, 最小適合シース径5F) にリマウントしたところ、6Fメディキットスーパーシース30cm長 (メディキット株式会社, 東京, 外径2.59mm) を通過することが確認できた。新たに左大腿動脈を穿刺し同6Fシースを挿入した。4Fマルチパーパスカテーテルと0.035インチラジフォークス®ガイドワイヤー (テルモ株式会社, 東京) で狭窄部にアプローチし、ワイヤーを0.035インチAmplatz Whisker (Cook Medical; Bloomington, IN) に交換、6Fシースを狭窄部の近位まで通過させた。ステントが狭窄部全体をカバーするように位置決めを行い (Fig. 2b)、6気圧で加圧し留置した。狭窄部は弾性硬で、拡大できたもののリコイルして軽度の狭窄が残存した。ステント両端の血管壁への密着が不十分であったため、同ステントのシステムバルーンを用

いて6気圧で加圧した後拡張を行った。ステント留置後の造影で最狭窄部は4.2mm、圧較差は40mmHgに改善し (Fig. 2c)、手技を終了した。足背動脈の触知は術前に比べて改善し、左右差は認めなかった。術後はヘパリンの持続投与を10単位/kg/時間で3日間行い、また術後翌日からアスピリンの内服を開始した。同剤は原疾患による狭窄の進行を懸念し現在まで内服を継続している。

ステント留置1か月後の心臓超音波検査で左室駆出率は72%、左室拡張末期径は27.9mm (113% of normal) に改善を認めた。ステント留置5か月後にスターリング™ 8mm/40mmを12気圧、さらにSHIDEN® 7mm/20mmを14気圧で加圧し再拡張した。圧較差は78mmHgから44mmHgに改善した。また7か月後にコンクエスト® 7mm/20mmを30気圧まで加圧して再拡張し、圧較差は24mmHgから15mmHgに改善した。1年3か月後にステントがカバーしていない近位端に新たに出現した狭窄に対してOmnalink Elite® 10mm/39mmを14気圧まで加圧して留置し、圧較差は50mmHgから10mmHgに改善した。この際、初回と同様に左大腿動脈を穿刺血管として使用したが問題なく、また体重11.4kgと成長していたことからリマウント手技は行わなかった。経過中、原疾患による血管狭窄の進行により左総頸動脈の完全閉塞を認めたが右総頸動脈は開存しており、脳および上肢の血流は維持された。下行大動脈の狭窄部の圧較差は最終的に16mmHgとなり、現在3歳 (身長92.6cm, 体重14.2kg) まで無症状で順調に発育している。

考 察

先天性および小児期発症心疾患に対するカテーテル治療の適応ガイドライン³⁾では、大動脈縮窄に対するステ

ント留置術は、縮窄部収縮期圧較差が20mmHg以上であり、安全にステントを留置できる体格（体重25kg以上）で、成人の大動脈径まで拡大できるステントを留置できる場合、術後再縮窄でクラスI、未手術縮窄ではIIaの推奨である。一方、複雑な大動脈弓の狭窄があり手術のリスクが高いと考えられる乳児、新生児の大動脈縮窄に対してはステント留置を考慮することがあるとも記載されているが、対象は限定的である。本症例は狭窄部位の特徴やIVUSの所見から、いわゆる異型大動脈縮窄であり、病理診断の機会がなく確定診断には至っていないものの、高安動脈炎や線維筋性異形成などの基礎疾患に基づく血管狭窄が疑われた^{2,4,5}。高安動脈炎に対するバルーン血管形成術では長い狭窄病変において拡張効果が不十分であったり、大動脈解離の危険性が高いことが指摘されている⁶。また、炎症性変化の慢性期には外科手術も考慮されるが、急性期では血管損傷や再狭窄の懸念が存在する。加えて、狭窄の範囲が長く広範囲のパッチ形成や人工血管への置換が必要な可能性もあり、手術侵襲や長期予後にも懸念があった。このため姑息的ステント留置により成長を図ることが望ましいと判断した。

乳児の大動脈縮窄に対するステント留置では、大腿動脈の穿刺血管損傷のリスクが大きな問題となる。乳児期早期の大動脈の内径は概ね3mm以下であり⁷、シース外径が血管内径以下にするためには理論上6F程度に限界があると思われる。血管径に対するシースサイズが大きいほど、またシース長が長いほど血管損傷のリスクは高く、Tadphaleらは大腿動脈径が3mm未満、シースの外径/血管径の比が0.4を超える場合が血管閉塞のリスクであったと報告しており⁸、Dingらは体重5kg未満で有意に血管損傷の発生率が高く、体重15kg未満に対するロングシースの使用は血管損傷の危険因子であったと報告している⁹。一方で、Parkらは生後3日から3か月の大動脈縮窄12例に対するバルーン血管形成術で1例（8.3%）に大腿動脈閉塞を認めたと報告している。バルーンのシースサイズに関する記載は無いが血管内エコーが行われており、少なくとも5F以上のシースが使用されている¹⁰。また、Generaらは大動脈縮窄術後の再狭窄をきたした小児34例（うち乳児27例）に対するステント留置術で4Fから7Fのシースを留置し1例に大腿動脈閉塞を認めたと報告している¹¹。これらの文献を参考に症例の体格を勘案し6Fシース留置にともなう大腿動脈閉塞のリスクは許容範囲内と判断した。大動脈縮窄では血管内径に近い外径のシースを留置しても、縮窄が解除されれば大腿動脈は閉塞しづらい印象を持っている。科学的なエビデンスは無いが、狭窄解除による下肢の血圧上昇などが影響しているのかもしれない。

ステントのリマウントはラージサイズ、エクストララージサイズのステントにおいて、至適なバルーンサイズの選

択やシースのサイズダウンの目的で必須の手技である¹²。一方で、バルーンへの不十分な圧着によるステントの位置移動や、ステント辺縁によるバルーンの損傷などの潜在的な合併症増加の懸念も存在する。今回、われわれはOmnalink Elite[®]をムスタング[™] 5mm/40mmにリマウントしてシースサイズを1F小さくすることで、穿刺血管損傷を回避し、ステント移動やバルーン破裂などの合併症なく、ステント留置を安全に施行することができた。ミディウムサイズのステントにおけるリマウント手技についての報告は少なく、Omnalink Elite[®]のリマウントを行った症例は知り得た限りで初の報告である。ステントのリマウントに関して、専用のクリンピングツールは存在せず、経験と習熟を要する手技で、基本的に全て用手的に行われる。バルーンはステント長に対してショルダーが形成される適切な長さのものを選択する。ステントの位置移動を防ぐ手立てとして、ガーゼを用いてバルーンのコーティングを落とすこと、造影剤を用いてステントを“糊付け”すること、シースに収納後にバルーンにわずかに圧をかけることなどの工夫が記載されている。その他、外科用ベッセルテープや止血弁をクリンピングツールとして使用する術者もいる。本症例では、指先を用いて用手的に圧着を行うことで、ステントの位置移動は生じなかった。スターリング[™] 5mm/40mmへのリマウントはステントとバルーンの圧着が弱かったため断念したが、同バルーンのプロファイルがステントに対して小さすぎたことが原因であると考えられる。このことから、ステントのリマウント手技に際しては、ステントの径に対してリマウントするバルーンのプロファイルに限界があることにも留意が必要である。

穿刺血管損傷のリスクを軽減する方法として、使用するシースやアクセスルートを選択も重要である。シースは種類によって外径がわずかに異なり、グライドシーススレンダー[®]（テルモ株式会社、東京）など橈骨動脈アプローチ用のシースは同じ内径であっても1Fほど外径が小さくなるため有用である。屈曲しやすいなどの問題点があるが¹³、今回のように直線的なアプローチの場合は同シースも選択肢となる。しかし、グライドシーススレンダー[®]は最長16cmであり、本症例では病変に届かない長さであったため使用できなかった。病変までの距離が16cm以内であれば、ステントのリマウントを行うことにより、6Fのグライドシーススレンダー（外径5F）相当で留置できる可能性がある。乳児では成人と異なり、大腿動脈より内頸動脈や腋窩動脈の内径が大きいことが知られており、アクセスとしてこれらの動脈を用いる報告も存在する¹⁴。また、海外では使用する素材やデザインの工夫により新たなステントが開発されており、13mmまで拡大可能で最小適合シース径が6Fのプレマウントのミディウムサイズステントも存在する¹⁵。本邦においても新たなステントの開発や海外のステントの早期導入が望まれる。

結 語

3か月男児の異型大動脈縮窄に対して、ミディアムサイズのステントを小径のバルーンにリマウントすることでシースのサイズダウンが得られ、ステント留置を安全に施行できた。本手技は乳幼児に対するステント留置において有用である。

引用文献

- 1) Boe BA, Zampi JD, Schumacher KR, et al: The use and outcomes of small, medium and large premounted stents in pediatric and congenital heart disease. *Pediatr Cardiol* 2016; 37: 1525–1533
- 2) Kaneko K, Someya T, Ohtaki R, et al: Congenital fibromuscular dysplasia involving multivessels in an infant with fatal outcome. *Eur J Pediatr* 2004; 163: 241–244
- 3) 富田英, ほか: 先天性および小児期発症心疾患に対するカテーテル治療の適応ガイドライン. *日小循誌* 2012; 28: s1–s40
- 4) Rumman RK, Nickel C, Matsuda-Abedini M, et al: Disease beyond the arch: A systematic review of middle aortic syndrome in childhood. *Am J Hypertens* 2015; 28: 833–846
- 5) Janzen J, Vuong PN, Rothenberger-Janzen K: Takayasu's arteritis and fibromuscular dysplasia as causes of acquired atypical coarctation of the aorta: Retrospective analysis of seven cases. *Heart Vessels* 1999; 14: 277–282
- 6) Jeong HS, Jung JH, Song GG, et al: Endovascular balloon angioplasty versus stenting in patients with Takayasu arteritis: A meta-analysis. *Medicine (Baltimore)* 2017; 96: e7558
- 7) Tadphale SD, Zurakowski D, Bird LE, et al: Construction of femoral vessel nomograms for planning cardiac interventional procedures in children 0–4 years old. *Pediatr Cardiol* 2020; online ahead of print
- 8) Tadphale S, Yohannan T, Kauffmann T, et al: Accessing femoral arteries less than 3 mm in diameter is associated with increased incidence of loss of pulse following cardiac catheterization in infants. *Pediatr Cardiol* 2020; 41: 1058–1066
- 9) Ding L, Pockett C, Moore J, et al: Long sheath use in femoral artery catheterizations in infants <15 kg is associated with a higher thrombosis rate: Proposed protocol for detection and management. *Catheter Cardiovasc Interv* 2016; 88: 1108–1112
- 10) Park Y, Lucas VW, Sklansky MS, et al: Balloon angioplasty of native aortic coarctation in infants 3 months of age and younger. *Am Heart J* 1997; 134: 917–923
- 11) Gendera K, Ewert P, Tanase D, et al: Balloon-expandable stents for recoarctation of the aorta in small children. Two centre experience. *Int J Cardiol* 2018; 263: 34–39
- 12) Mullins CE: *Cardiac Catheterization in Congenital Heart Disease: Pediatric and Adult*. Malden, Blackwell Publishing, 2006, chapter 22
- 13) Mathis C, Romans R, Divekar A: Variation in the outer diameter of vascular sheaths commonly used in infant cardiac catheterization. *Catheter Cardiovasc Interv* 2020; online ahead of print
- 14) Choudhry S, Balzer D, Murphy J, et al: Percutaneous carotid artery access in infants <3 months of age. *Catheter Cardiovasc Interv* 2016; 87: 757–761
- 15) Travelli FC, Sullivan PM, Takao C, et al: The Valeo stent: A pre-mounted, open-cell, large stent for use in small children with CHD. *Cardiol Young* 2016; 26: 1187–1193